

소아의 직장에서 발생한 단일 선종성용종 (isolated adenomatous polyp) 1례

-세관용모성 선종(tubulovillous adenoma)-

한림대학교 의과대학 소아과학교실, ¹방사선과학교실, ²해부병리학교실
연세대학교 의과대학 ³소아과학교실, ⁴해부병리학교실

김제우 · 송준영 · 이해경 · 윤혜선 · 양 익¹
심정원² · 정기섭³ · 김호근⁴

A Case of Isolated Adenomatous Polyp of Rectum in a Child

-Tubulovillous adenoma-

Je Woo Kim, M.D., Jun Young Song, M.D., Hae Kyoung Lee,
He Sun Yun, M.D., Ik Yang, M.D.¹, Jung Weon Shim, M.D.²
Ki Sup Chung, M.D.³ and Ho Keon Kim⁴

Departments of Pediatrics, ¹Radiology and ²Pathology, Hallym University
College of Medicine, Departments of ³Pediatrics and ⁴Pathology Yonsei University
College of Medicine, Seoul, Korea

Isolated rectal adenomatous polyp without genetic background is rarely found in children. A 4-year and 5 month-old girl was admitted for intermittent bloody stools lasting 4 months. A 1.5×1.2 cm sized rectal polyp was found by air contrast barium enema. Endoscopic polypectomy was performed without complications. In histopathologic examination, it was found to be a tubulovillous adenoma. Typical radiologic, colonoscopic, and pathological pictures are presented. (**J Korean Pediatr Gastroenterol Nutr 1999; 2: 250~255**)

Key Words: Isolated, Adenomatous, Polyp, Rectum, Children, Tubulovillous

접수 : 1999년 7월 1일, 승인 : 1999년 9월 7일

책임저자 : 김제우, 150-071, 서울특별시 영등포구 대림 1동 948-1, 한림의대 강남성심병원 소아과
Tel: 02) 829-5144, Fax: 02) 845-6238, E-mail: jewookim@hitel.net

서 론

소아에서 발견되는 소화관 용종은 직장 및 S상 결장에서 단일로 발생하는 경우가 대부분으로 성인에서 발생하는 다발성 용종과는 다소 차이가 있다. 또한 소아의 소화관 용종은 병리조직학적인 측면에서도 연소성 용종(정체성 또는 염증성 용종)으로 성인에서 주로 발생하는 선종성 용종과는 다르다^{1,2)}.

소아에서도 선종성 용종(adenomatous polyp)이 발견되는 경우가 있으나 성인에 비하면 발생 빈도가 매우 드물다. 따라서 소아에서 선종성 용종(adenomatous polyp)이 발견되면 가족성 다발성 용종증(familial polyposis coli)과 Gardner 증후군 등의 유전적 질환이 선행되어 있는지 조사해 볼 필요가 있다³⁾.

본 증례와 같이 소아에서 선행된 유전적 질환 없이 조직 전체가 선종성 용종으로 확진된 증례는 문헌에서 찾아보기 힘들며, 문헌에 보고된 대부분의 소아의 선종성 용종은 연소성 용종 조직 중의 일부가 선종성 조직으로 변형된 경우이다^{1,2)}.

이에 저자 등은 내시경적 용종절제술 후 시행한 조직병리 검사상 세관용모성 선종(tubulovillous adenoma)으로 진단된 직장의 단일 선종성 용종 1례를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 아: 장○○, 여아, 4년 5개월.

주 소: 내원 4개월 전부터의 혈변.

과거력 및 가족력: 내원 수일 전에 외부병원에서 심실중격결손증으로 진단 받았으며 그 외에 특기할 만한 과거 병력은 없었다. 대장암과 연소성 용종의 가족력도 없었다.

현병력: 환아는 수년 전부터 배변시 통증을 호소하여왔으며, 배변 횟수는 하루에 1~2회 정도였다. 환아는 내원 4개월 전부터 간헐적으로 혈변이 있었으며, 내원 일주일 전부터는 배변 후 변

기로 혈액이 뚝뚝 떨어지는 증상이 발생하여 본 병원 소아과에 내원하였다.

이학적 소견: 체중 18 Kg (50~75p), 체온 36.4°C, 맥박수 분당 108회, 호흡수 분당 24회였다. 의식은 명료하였고 피부 및 구강점막에 비정상적인 색소 침착은 없었다. 결막은 창백하지 않았으며, 흉부청진상 좌흉골하연에서 III/IV도의 범수축기 잡음이 있었다. 복부는 부드러웠으며 종괴는 촉진되지 않았다. 직장수지검사 상 종괴는 만져지지 않았고, 항문열(anal fissure)이나 항문 피부연종(anal skin tag)은 없었다.

검사 소견: 혈액화학적검사상 백혈구 10,960/mm³ (중성구 53%, 임파구 36%, 단핵구 5%), 혈색소 13.9 g/dL, 혈소판 320,000/mm³이었다. 소변검사와 혈액화학검사는 정상이었고, 대변에서 *Salmonella* 나 *Shigella*, *Yersinia* 등은 검출되지 않았다.

방사선 소견: 대장용종 의증하에 공기대조 바륨 관장조영술을 시행한 결과 1.5×1.2 cm의 종괴가 직장 후벽에서 관찰되었다(Fig. 1).

내시경적 용종절제술: 대장경검사(Olympus CF LB3R)상 항문환(anal verge)으로부터 3 cm 상방의 직장 후벽에 감씨 정도 크기의 Yamada Type III 용종이 관찰되어 올가미(snare)를 이용하여 제거하였다. 용종절제 후 장천공이나 출혈 등의 합병증은 없었다(Fig. 2).

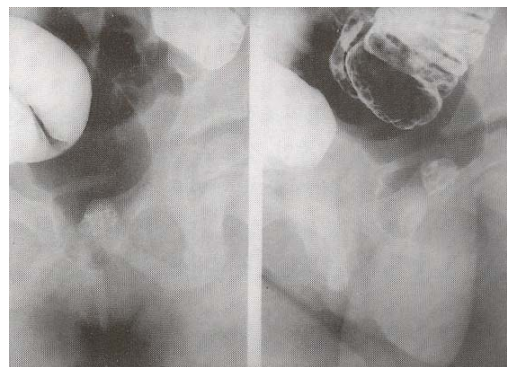


Fig. 1. Air contrast barium enema shows 1.5×1.2 cm sized lobulated velvet-like polypoid lesion in posterior wall of rectum.

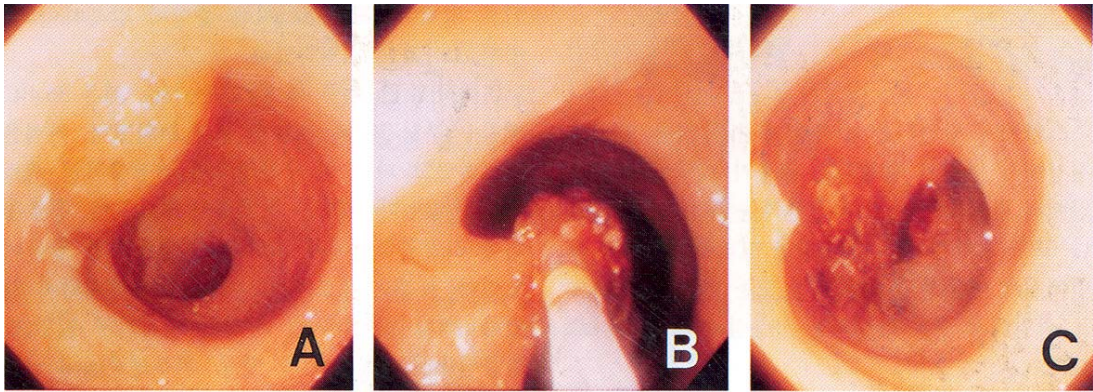


Fig. 2. Colonoscopic findings. (A) Persimmon seed sized, lobulated, yellowish, and friable mass on posterior wall of rectum at 3 cm above anal verge. (B) Well visualized stalk after snaring. (C) Minimal remnant of stalk after endoscopic polypectomy.

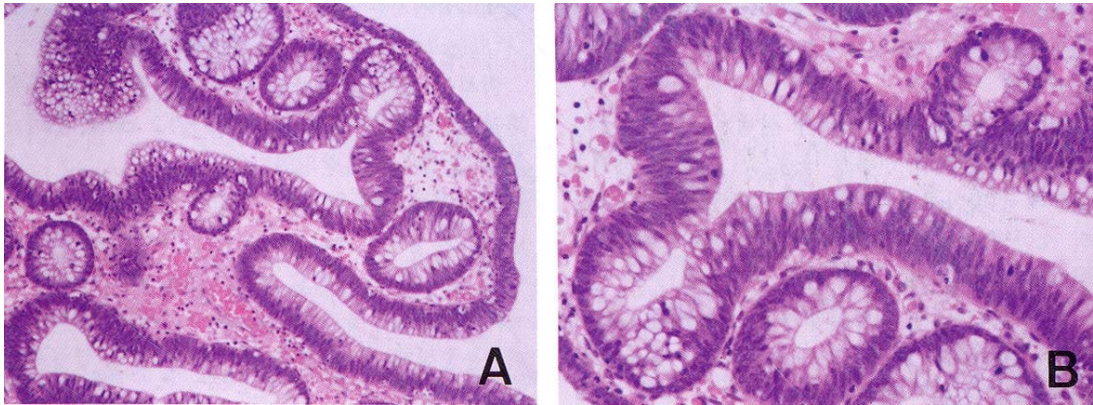


Fig. 3. Pathologic findings. (A) Adenomatous change with elongated "picket-fence" nuclei and inflamed stroma with chronic inflammatory cells (Hematoxylin and eosin; $\times 40$). (B) The glands showing tall columnar epithelial cells and goblet cells proliferate in tubulovillous pattern (Hematoxylin and eosin; $\times 200$).

병리조직 소견: 병리조직학적 검사 결과 용종전체가 세관용모성 선종인 것으로 판명되었다(Fig. 3).

경과: 시술 후 더 이상의 혈변은 없었다. 경구영양이 잘 이루어져 시술 후 3일째 퇴원하였으며, 6개월간 추적 관찰하였으나 혈변은 없었다.

고 찰

대부분의 소화관 용종은 출혈, 복통 또는 장폐색 등의 증상이 발현되기 전까지는 증상 없이 지내게

되며, 2~10세 사이의 연령이 되어야 비로소 증상이 발현된다. 소아에서는 장출혈로 증상이 발현되는 경우가 가장 많다^{1,2)}. 장출혈의 빈도는 Poddar 등⁴⁾은 98.7%, Ko 등⁵⁾은 97.7%라고 보고한 바 있다. 용종에서 출혈이 발생하는 기전은 정확히 밝혀 지지지는 않았지만 대변에 의한 물리적 외상과 용종의 성장에 따른 허혈성 손상에 의한 것으로 생각되고 있다^{1,2)}.

성인에서는 소화관 용종이 다발성으로 발생되나, 소아에서는 직장과 S장결장에서 대부분이 단

일성으로 발생된다. Poddar 등⁴⁾은 85%, Ko 등⁵⁾은 83.3%의 용종이 직장과 S상결장에 발생된다고 보고하였다. 그러나 최근 내시경술의 발달로 직장과 S상결장 근위부에서 발견되는 용종의 빈도가 증가되고 있으며, 또한 소아에서도 다발성 용종이 발견되는 경우가 증가되고 있다^{1,2)}.

소아에서 발생하는 용종은 임상적으로 연소성 용종(juvenile polyp)과 다발성 용종증후군(polyposis syndrome)으로 구분된다. 이 중 약 90%는 가족력 혹은 유전질환이 없이 후천적으로 발생하는 연소성 용종이며, 나머지 10%는 가족성 다발성 용종증(familial polyposis coli), Gardner 증후군 또는 Peutz-Jeghers 증후군 등 상염색체 우성 유전질환에 의하여 발생하는 다발성 용종 증후군이 대부분이다^{1~3)}. 본 증례는 가족력과 유전적 질환의 증거가 없는 연소성 용종에 속한다.

조직학적인 측면에서 용종은 선종성 용종(adenomatous polyp)과 염증성 용종(inflammatory polyp), 과오종성 용종(hamartomatous polyp)으로 구분된다(Table 1)¹⁾. 선종성 용종은 소아에서는 드물고 성인에서 주로 발생하는 대장암의 전암병소이다. 산딸기와 유사한 모양을 가지며, 여러 개의 소엽으로 구성되어 있다. 선종성 용종은 단일 용종(isolated polyp), 가족성 다발성 용종증, Gardner 증후군 및 Turcot 증후군으로 세분된다. 염증성 용종은 소아에서 가장 흔한 용종으로 정체성 용종(retention polyp), 연소성 용종(juvenile polyp), 증식성 용종(hyperplastic polyp) 등으로 불리기도 한다^{1~3)}. 본 증례는 선종성 용종에 속하며, 병리조직학적으로 세관 용모성 선종으로 확진되었다.

저자 등은 PubMed (<http://www.ncbi.nlm.nih.gov/PubMed/medline.html>)를 검색하여 얻은 초록내용과 논문 원본 내용을 참조하여 소아에서 발생한 선종성 용종의 빈도를 알아보았다(Table 2). Poddar 등⁴⁾은 소아의 대장용종 236례를 분석한 결과 연소성 용종이 93%(단일 용종 76%, 다발성 용종 16.5%), 연소성 다발성 용종증이 7%이었다고 보고하였다. 이중 선종성 변화가 있었던 용종은 11% (연소성 다발성 용종증의 59%, 연소성 용종의 5%)였다. Ko

Table 1. Classification of Polyps

Adenomatous
Isolated polyp
Familial polyposis coli
Gardner's syndrome
Turcot's syndrome
Inflammatory
Isolated polyps
Juvenile polyposis coli
Generalized juvenile polyposis coli
Cronkhite-Canada syndrome
Hamartomatous
Peutz-Jeghers syndrome
Cowden's disease

Winter HS: Intestinal polyps. In Walker WA, Durie PR, Hamilton JR, Walker-Smith JA, Watkins JB(Eds): Pediatric gastrointestinal disease. 1st ed, Philadelphia: BC Decker Inc, 1991: 739-753.

등⁵⁾은 소아의 대장 용종 103례를 분석한 결과 연소성 용종이 84.5%, 단일 선종성 용종이 2례, 다발성 용종 증후군이 14례였다고 보고하였다.

국내에서도 소아 용종과 연소성 다발성 용종증(juvenile polyposis coli)에 대한 보고가 다수 있으며 각각 외과적 및 내시경적 방법으로 절제하였다고 보고되어 있다^{19~22)}. 국내 소아에서 절제된 용종은 장수경 등¹²⁾에 의하면 59례 중 10례가 선종성 용종이었으며 이중 2례는 Peutz-Jeghers 증후군에서 발생한 선종이었고 나머지 8례(15.3%)는 단일 선종성 용종이었다. 그러나 장성욱 등¹⁸⁾은 15례의 용종 중 선종성 용종은 하나도 없었다고 보고하였다. 국내에서의 선종성 용종의 빈도는 외국의 보고에 비하면 많은 편으로 향후 전국적으로 많은 자료를 수집하여 정확한 빈도를 조사해 볼 필요가 있을 것으로 생각된다.

국내외 보고를 종합하면 선종성 용종은 전체 용종의 4.4%였으며, 단일 선종성 용종은 전체 용종의 2.7%, 전체 선종성 용종의 약 50% (18/36)를 차지하는 것처럼 보인다(Table 2). 부검연구 결과 성인의 약 34%에서 대장 용종이 발견되며, 대장 근위부의 선종성 용종은 결장 혹은 S상결장에 증식성 용종(hyperplastic polyp)을 가지고 있는 경우 29%에

Table 2. Adenomatous Polyps of Childhood in the Literature

Authors	Incidence of adenomatous polyps	
	Overall	Isolated*
Torres <i>et al.</i> ⁶⁾	1/214	-
Garcia de Davila MT and Marin A. ⁷⁾	7/200	-
Podder <i>et al.</i> ⁴⁾	17/152	5/152
Mougenot <i>et al.</i> ⁸⁾	1/129	-
Huaroto <i>et al.</i> ⁹⁾	14/122	-
Nevoral <i>et al.</i> ¹⁰⁾	1/113	0/113
Ko <i>et al.</i> ⁵⁾	2/103	2/103
Jalihah <i>et al.</i> ¹¹⁾	3/74	1/74
장수경, 정기섭 ¹²⁾	10/59	8/59
Nagasaki <i>et al.</i> ¹³⁾	1/50	1/50
Bartnik <i>et al.</i> ¹⁴⁾	1/42	0/42
Kapetanakis <i>et al.</i> ¹⁵⁾	0/31	0/31
Latt <i>et al.</i> ¹⁶⁾	1/29	1/29
Spinelli <i>et al.</i> ¹⁷⁾	1/20	-
장성욱 등 ¹⁸⁾	0/15	0/15
Total	60/1353 (4.4%)	18/668 (2.7%)

*: isolated adenomatous polyp without family history or polyposis syndrome

서, 선종성 용종을 가지고 있는 경우에는 33%에서 발견된다고 한다^{23~26)}. 따라서 성인에서 용종이 발견되면 정기적인 대장경검사가 필요하다.

소아에서 용종이 발견된 경우 정기적으로 대장경검사를 시행하여야 할 것인지는 아직 정해진 바 없다. 그러나 대장암 혹은 선종성 용종의 가족력이 있을 때는 사춘기에 즈음하여 증상이 없더라도 대장경검사를 시행하여야 한다. 특히 사춘기 이전에 연소성 다발성 용종증으로 진단 받은 환아는 진단 후 수년간 년 1회씩 대장경검사를 시행 받도록 되어 있으나, 대장암의 발생 빈도가 성인에 비하여 낮기 때문에 대장 절제술은 가능하면 사춘기 이후에 시행하는 것이 권장된다^{1,2)}. 가족성 다발성 대장 용종증이나 Gardner 증후군과 같이 대장암의 발생 빈도가 높은 경우에는 어린 나이에 대장암이 발생할 수 있기 때문에 조기에 결장 절제술의 시행이 권장된다^{27,28)}.

본 증례와 같이 가족력 없이 직장내 단일 선종성 용종이 있었던 경우에는 추적 대장경검사가 꼭

필요한 것은 아니다. 그러나 출혈, 복통 또는 장폐색 등 증상의 재발현 유무에 따라 향후 추적검사여부가 결정될 것으로 생각된다.

결 론

저자들은 내시경적 용종절제술 후 시행한 병리조직검사상 세관용모성 선종(tubulovillous adenoma)으로 진단된 직장의 단일 선종성 용종 1례를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

- 1) Winter HS. Intestinal polyps. In Walker WA, Durie PR, Hamilton JR, Walker-Smith JA, Watkins JB (Eds): Pediatric gastrointestinal disease. 1st ed, Philadelphia: BC Decker Inc, 1991; 739-53.
- 2) Gonzalez RP, Andres JM. Polyps and polyposis syndromes. In Wyllie R, Hyams JS (Eds): Pediatric gastrointestinal disease. 1st ed, Philadelphia: WB Saun-

- ders Co, 1993; 732-41.
- 3) Mestre JR. The changing patterns of juvenile polyps. *Am J Gastroenterol* 1986; 81: 312-4.
 - 4) Poddar U, Thapa BR, Vaiphei K, Singh K. Colonic polyps: experience of 236 Indian children. *Am J Gastroenterol* 1998; 93: 619-22.
 - 5) Ko FY, Wu TC, Hwang B. Intestinal polyps in children and adolescents--a review of 103 cases. *Chung Hua Min Kuo Hsiao Erh Ko I Hsueh Hui Tsa Chih* 1995; 36: 197-202.
 - 6) Torres P, Rossomando A, Delpretti F, Trejo C, Barra V, Gomez-Rodriguez G, et al. The usefulness of endoscopic polypectomy of rectosigmoid and colon in childhood. *G E N* 1991; 45: 51-4.
 - 7) Garcia de Davila MT, Marin A. Intestinal polyps in childhood. *Acta Gastroenterol Latinoam* 1990; 20: 205-10.
 - 8) Mougenot JF, Baldassarre ME, Mashako LM, Hanteclair GC, Dupont C, Leluyer B. Recto-colic polyps in the child. Analysis of 183 cases. *Arch Fr Pediatr* 1989; 46: 245-8.
 - 9) Huaroto M, Lozano R, Beteta O, Huaman C, Salazar S. Pediatric colonoscopic polypectomy. *Rev Gastroenterol Peru* 1994; 14: 204-8.
 - 10) Nevorál J, Fric P, Sedlackova M, Liskova A. Endoscopic colorectal polypectomy in children and adolescents. *Cesk Pediatr* 1990; 45: 347-9.
 - 11) Jalihal A, Miaera SP, Arvined AS, Kamath PS. Colonoscopic polypectomy in children. *J Pediatr Surg* 1992; 27: 1220-2.
 - 12) 장수경, 정기섭. 소아 위장관 용종에 관한 임상적 연구. *소아과* 1987; 30: 1134-41.
 - 13) Nagasaki A, Yamanaka K, Toyohara T, Ohagami H, Aoki T, Sueishi K. Management of colorectal polyps in children. *Acta Paediatr Jpn* 1993; 35: 32-5.
 - 14) Bartnik W, Butruk E, Ryzko J, Rondio H, Rasinski A, Orlowska J. Short- and long-term results of colonoscopic polypectomy in children. *Gastrointest Endosc* 1986; 32: 389-92.
 - 15) Kapetanakis AM, Vini D, Plitsis G. Solitary juvenile polyps in children and colon cancer. *Hepatogastroenterology* 1996; 43: 1530-1.
 - 16) Latt TT, Nicholl G, Domizio P, Walker-Smith JA, Williams CB. Rectal bleeding and polyps. *Arch Dis Child* 1993; 69: 144-7.
 - 17) Spinelli P, Pizzetti P, Pauletti A, Della Briotta I. Endoscopic treatment of colorectal polyps in children. *Pediatr Med Chir* 1989; 11: 341-2.
 - 18) 장성욱, 박근수, 백태원, 강진무. 소아 연소성 용종에 관한 임상적 연구. *계명의대논문집* 1995; 14: 137-43.
 - 19) 김재익, 채윤문. 혈변을 주소로 한 소아의 외과적 질환. *외과학회지* 1981; 23: 525-37.
 - 20) 신승식, 최하주, 박종영, 노준명. 결장경을 이용한 연소성 용종절제 1례. *인간과학* 1985; 9: 617-20.
 - 21) 심진섭, 최상묵, 김은미, 박재욱, 이상주. 비가축성 다발성 연소성 결장 용종증 1례. *소아과* 1992; 35: 851-61.
 - 22) 김중욱, 공홍표, 박강서, 김완섭, 이춘희. 범혈구 감소증이 동반된 범 위장관 연소성 용종증 1례. *소아과* 1996; 39: 423-30.
 - 23) Vatn MH, Stalsberg H. The prevalence of polyps of the large intestine in Oslo: an autopsy study. *Cancer* 1982; 15: 819-25.
 - 24) Williams AR, Balasooriya BA, Day DW. Polyps and cancer of the large bowel: a necropsy study in Liverpool. *Gut* 1982; 23: 835-42.
 - 25) Bombi JA. Polyps of the colon in Barcelona, Spain. An autopsy study. *Cancer* 1988; 61: 1472-6.
 - 26) Achkar E, Carey W. Small polyps found during fiberoptic sigmoidoscopy in asymptomatic patients. *Ann Intern Med* 1988; 109: 880-3.
 - 27) Leggett PL, Arensman RM, Falterman KW. Familial polyposis in children: early detection and preferred treatment. *South Med J* 1984; 77: 462-4.
 - 28) Boman BM, Levin B. Familial polyposis. *Hosp Pract* 1986; 21: 155-70.